

Casos Clínicos

Osteoma del conducto auditivo externo asociado a colesteatoma, un caso poco frecuente. Revisión de la literatura

Osteoma of the external auditory canal associated with cholesteatoma, a rare case. Review of the literature

Osteoma do canal auditivo externo associado ao colesteatoma, um caso raro. Revisão da literatura

Dra. Erika Caballero Meneses ⁽¹⁾, Dra. María Fernanda Tieso ⁽²⁾, Dr. Jorge Azocar ⁽³⁾, Dr. Daniel Pérez Gramajo ⁽⁴⁾.

Resumen

Los osteomas del conducto auditivo externo son lesiones tumorales óseas benignas, de crecimiento lento, no invasivas, poco frecuentes, unilaterales, ubicada en la extensión de la pared lateral del conducto auditivo externo, en la sutura tímpanomastoidea, generalmente asintomáticos, siendo su síntoma inicial la obstrucción del conducto.

Los colesteatomas del conducto auditivo externo son poco frecuentes, asociados a retención de restos epidérmicos con activación de osteoclastos y liberación de mediadores inflamatorios, la mayoría asintomáticos o poco sintomáticos; la asociación entre osteoma y colesteatoma es infrecuente, con muy pocos casos reportados en la literatura.

Presentamos un caso de un paciente masculino de 41 años, con otorrea purulenta e hipoacusia conductiva izquierda, de meses de evolución, con diagnóstico de osteoma asociado a colesteatoma del conducto auditivo externo izquierdo.

Los osteomas del conducto auditivo externo asociados a colesteatoma son poco frecuentes, su tratamiento depende de la localización, el tamaño y la sintomatología; los osteomas pequeños podrían tener manejo conservador, la cirugía se reserva para

osteomas grandes con síntomas (hipoacusia, infecciones a repetición, estenosis del conducto o patología tumoral asociada). En nuestro caso la mastoidectomía radical modificada con conservación de cadena fue el procedimiento elegido, encontrando un osteoma osteoide complicado con colesteatoma del conducto auditivo externo, el cual fue resecaado en su totalidad. Paciente asintomático en el momento, sin recidiva de la patología en los primeros 6 meses postoperatorios.

Palabras clave: Osteoma, colesteatoma, mastoidectomía radical modificada.

Abstract

Osteomas of the external auditory canal are non-invasive, slow-growing, unusual, unilateral, benign bone tumors; located in the extension of the lateral wall of the external auditory canal, in the tympanomastoid suture. Generally, they are asymptomatic, being its initial symptoms the canal obstruction.

Cholesteatoma of the external auditory canal are unusual, associated with retention of epidermal remnants with osteoclast activation and inflammatory mediators release. Most are asymptomatic or with few symptoms. The association between os-

⁽¹⁾ Jefe de Residentes Otorrinolaringología.

⁽²⁾ Médico Otorrinolaringología.

⁽³⁾ Médico Otorrinolaringólogo.

⁽⁴⁾ Médico Otorrinolaringólogo, jefe del Servicio de Otorrinolaringología.

Hospital Interzonal General de Agudos Eva Perón, de San Martín. Buenos Aires, Argentina

Mail de contacto: erika112693@gmail.com

Fecha de envío: 18 de diciembre de 2018 - Fecha de aceptación: 17 de junio de 2019

teoma and cholesteatoma is unusual, with rare cases reported in the literature.

We present a case of a 41 years old male patient, with initial symptoms of purulent otorrhea and left conductive hearing loss of months. He had diagnosis of osteoma associated with cholesteatoma of the left external auditory canal.

Osteoma of the external auditory canal associated with cholesteatoma is rare. Its treatment depends on the location, size and symptoms. Small osteomas could be treated conservatively; surgery is aimed to large osteomas with symptoms (hearing loss, recurrent infections, stenosis of the canal or associated tumor pathology). In our case, modified radical mastoidectomy, with chain preservation was the elected procedure. Complicated osteoid osteoma together with cholesteatoma of the external auditory canal was found. It was resected completely. After 6 months surgery, patient is asymptomatic without recurrence of the pathology.

Keywords: Osteoma, cholesteatoma, modified radical mastoidectomy.

Resumo

Os osteomas do conduto auditivo externo são lesões tumorais ósseas benignas e de crescimento lento, não invasivas, infrequentes, unilaterais, localizadas na extensão da parede lateral do meato acústico externo, na sutura timpânico-mastoide, geralmente assintomática, sendo o sintoma inicial a obstrução do canal.

Os colesteatomas do canal auditivo externo são infreqüentes, associados à retenção de remanescentes epidérmicos com ativação de osteoclastos e liberação de mediadores inflamatórios, em sua maioria assintomáticos ou pouco sintomáticos. A associação entre osteoma e colesteatoma é infrequente, com poucos casos relatados na literatura.

Apresentamos um caso de paciente do sexo masculino, 41 anos, com otorreia purulenta e hipoacusia condutiva esquerda, com meses de evolução, com diagnóstico de osteoma associado ao colesteatoma do conduto auditivo externo esquerdo.

Osteomas do conduto auditivo externo associados ao colesteatoma são infrequentes, seu tratamento depende da localização, tamanho e sintomas, osteomas pequenos poderiam ter manejo conservador; a cirurgia é reservada para grandes osteomas com sintomas (perda auditiva, infecções recorrentes, estenose do conduto ou patologia tumoral associada). No nosso caso, realizamos a mastoidectomia radical modificada com preservação da cadeia óssea, esse

foi o procedimento escolhido, encontrando um osteoma osteóide complicado, com colesteatoma do meato acústico externo, que foi ressecado em sua totalidade. Paciente assintomático no momento, sem recidiva da patologia nos primeiros 6 meses de pós-operatório.

Palavras-chave: Osteoma, colesteatoma, mastoidectomia radical modificada.

Introducción

Los osteomas del conducto auditivo externo (CAE) son lesiones tumorales óseas, de crecimiento lento, unilaterales, poco frecuentes, con una incidencia promedio de 0,05% de las cirugías otológicas, de predominio en el sexo masculino y en la cuarta década de la vida. ⁽¹⁾ Pueden estar asociados a traumatismos, cirugía otológica, radioterapia o infecciones crónicas; sin embargo, la mayoría de ellos son de etiología desconocida. ^(2,3)

La presencia de osteoma asociado a colesteatoma es muy infrecuente, con muy pocos casos reportados en la literatura. ^(1,2) Nuestro caso corresponde a un hombre de 41 años, quien presentó un osteoma asociado a colesteatoma en CAE izquierdo. Fue tratado con mastoidectomía radical modificada, con buenos resultados. Se realizó una revisión de la literatura médica en MEDLINE database, usando palabras clave en inglés: Osteomas, cholesteatoma, osteoma associated to colesteatoma, modified radical mastoidectomy.

Objetivo

Mostrar un caso de un paciente con osteoma del conducto auditivo externo, asociado a colesteatoma, su clínica, su representación imagenológica, su grado de pérdida auditiva, su resolución quirúrgica y resultados postoperatorios.

Material y método

Corresponde a un estudio descriptivo, reportando un caso de un paciente de 41 años, con diagnóstico de osteoma de CAE izquierdo asociado a colesteatoma, el cual fue diagnosticado y tratado en el Servicio de Otorrinolaringología del Hospital Eva Perón, de San Martín.

Las variables analizadas fueron edad, sexo, síntomas iniciales, audiometría e imágenes diagnósticas pre y postoperatorias; intraoperatoriamente se analizó: Abordaje quirúrgico, materiales de reconstrucción, complicaciones, recurrencia y seguimiento.

Resultados

Paciente masculino de 41 años, sin antecedentes médicos u otológicos previos, con síntomas de otorrea fétida e hipoacusia izquierda de meses de evolución, sin fiebre, sin vértigos u otra sintomatología. Valorado en otras instituciones donde fue tratado de otitis externa en múltiples ocasiones, recibiendo manejo antibiótico vía oral y tópico, asociado a glucocorticoides sin mejoría.

Al examen físico se constató otorrea fétida escasa por CAE izquierdo; otomicroscopía izquierda: Masa dura cubierta con piel, no dolorosa a la palpación, que ocupaba la totalidad del CAE izquierdo, no permitiendo la visualización completa de la membrana timpánica; oído derecho ventilado sin alteraciones estructurales. Estudio audiológico preoperatorio: Audiometría tonal con normoacusia en oído derecho e hipoacusia de tipo conductiva moderada a severa en oído izquierdo. (Figura 1a)

La tomografía computada de alta resolución de hueso temporal reveló una masa tumoral ósea apendicular en topografía de pared anterior del CAE izquierdo, de 10 x 20 mm, con destrucción de la pared posterior del mismo y proyección a la cavidad mastoidea; se visualizó densidad de partes blandas en CAE, oído medio, antro, celdillas mastoideas y ático izquierdos, obliteración parcial de la trompa de Eustaquio, cadena de huesecillos conservada. Oído derecho: CAE, oído medio y cadena osicular sin alteraciones. (Figura 1b)

Debido a la edad del paciente, el sexo, la valoración clínica y otomicroscópica, los hallazgos en la tomografía computada y la pérdida auditiva tipo conductiva, se interpretó como una lesión compatible con osteoma del CAE izquierdo, estadio III de Naim. Se decide su exploración quirúrgica a través de un abordaje transmastoideo. Intraoperatoriamente se evidenció una lesión tumoral ósea en pared inferior y anterior del CAE izquierdo, la cual se reseca. Se comprobó la destrucción de la pared posterior del conducto con extensión de lesión ósea a la cavidad mastoidea; la caja timpánica se encontraba libre. Se identificó, además, material epidérmico que ocupaba el CAE y mastoides, sin extensión a caja timpánica. (Figura 2a)

Se realizó mastoidectomía radical conservadora, con conservación de la cadena osicular más meato-plastia, al encontrarse la cadena íntegra y móvil.

El reporte de anatomía patológica informó un osteoma osteoide asociado a colesteatoma de CAE. (Figura 2b)

Fig. 1. A. Audiograma tonal preoperatorio: normoacusia oído derecho e hipoacusia conductiva moderada a severa en oído izquierdo.

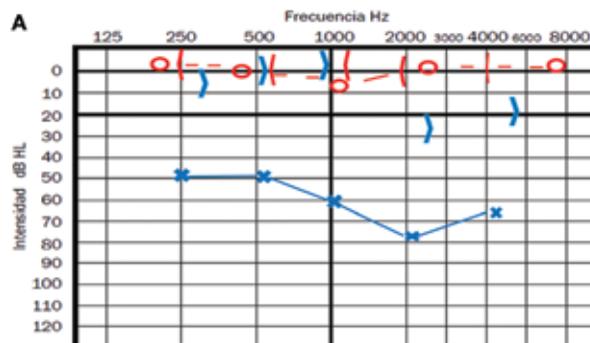


Fig.1. B. Tomografía computada cortes coronal y axial oído izquierdo: Masa tumoral ósea apendicular en topografía de pared anterior de conducto auditivo externo izquierdo, de 10 x 20 mm, con destrucción de pared posterior del mismo y proyección a cavidad mastoidea, densidad de partes blandas en conducto auditivo externo, oído medio, antro, celdillas mastoideas y ático.



Fig. 2. A Osteoma resecao que ocupa la cavidad mastoidea izquierda.

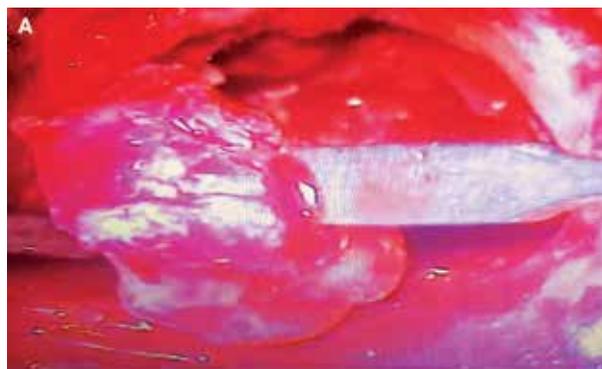
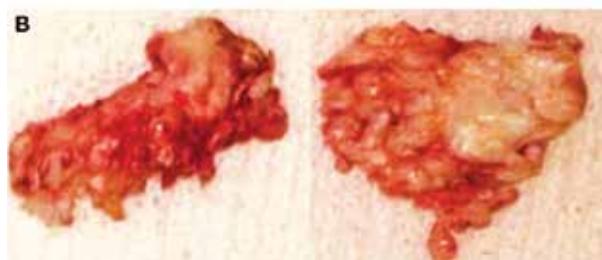


Fig. 2 B. Pieza anatómica. se observan 2 fragmentos de tejido óseo rodeado de tejido epidérmico.



El paciente se encuentra asintomático hasta el momento, con CAE permeable y membrana timpánica íntegra. La audiometría postoperatoria evidenció una mejoría de la hipoacusia conductiva izquierda, con un leve componente neurosensorial en las frecuencias agudas, (Figura 3a); tomografía computada de alta resolución con huella quirúrgica, cadena íntegra, sin evidencia de recidiva de la patología luego de 6 meses del tratamiento quirúrgico. (Figura 3b)

Fig. 3. A. Audiometría tonal. Normoacusia derecha, oído izquierdo con normoacusia para frecuencias conversacionales, con leve componente neurosensorial en frecuencias agudas.

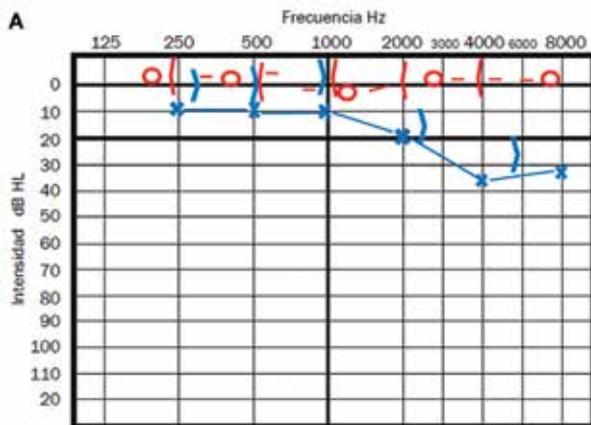
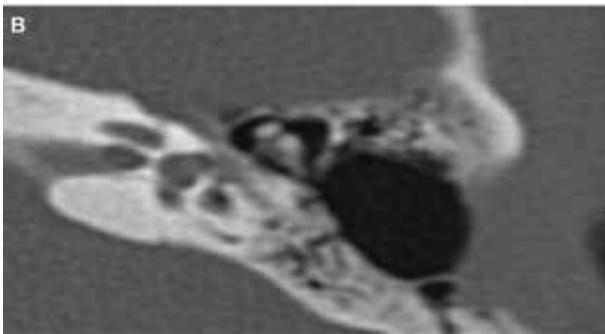


Fig. 3. B. Tomografía computada postquirúrgica, se evidencia huella quirúrgica mastoidea, cadena osicular íntegra, oído medio ventilado.



Discusión

El osteoma es una lesión tumoral ósea, benigna, de crecimiento lento, no invasivo, poco frecuente, pudiendo ubicarse en la extensión del hueso temporal, mastoides, huesos faciales y mandíbula, (1) siendo el CAE el sitio más frecuente, con una incidencia promedio del 0,05% del total de las cirugías otológicas. (2,3) Se presenta en la cuarta década de la vida, con una relación hombre-mujer 2-3:1 (4); puede permanecer asintomático durante años, su crecimiento

puede generar obstrucción del CAE e hipoacusia de predominio conductivo, además de impactación de cerumen o infecciones a repetición. (1,2)

Los osteomas generalmente se originan en la pared lateral del istmo del CAE, y su base se encuentra en la sutura tímpano-escamosa o tímpano-mastoides, sitio de la unión ósteo-cartilaginosa, denominado proceso conector por la presencia de una capa subcutánea gruesa. (2,5)

Su etiología incluye traumatismos, cirugías, radioterapia, infecciones crónicas, alteraciones hormonales; su etiología es desconocida en la mayoría de los casos. (2,4)

Histopatológicamente los osteomas son formaciones óseas recubiertas por periostio y epitelio escamoso, conformado por hueso laminar con pocos osteocitos que rodean los canales fibrovasculares. Estos canales son irregulares y contienen abundante tejido fibroso y vasos sanguíneos sinusoidales. El osteoma puede ser de tipo compacto, esponjoso o mixto. (1)

La incidencia de colesteatoma del CAE es poco frecuente, entre 0,1-0,5%. Histopatológicamente corresponde a una hiperplasia focal del epitelio escamoso del conducto con acumulación de células inflamatorias en el tejido estromal adyacente. El crecimiento invasivo del tejido mesenquimal resulta en acumulación necrobiótica y de restos de queratina en el conducto externo. (1)

Aunque su etiología es aún desconocida algunos factores podrían estar implicados, como la estenosis del conducto, la retención de restos epidérmicos, formación de quistes epiteliales con cubrimiento de epitelio escamoso. (4)

Toynbee fue el primero en referirse al colesteatoma del CAE en 1854, describiéndolo como un molusco contagioso. (3) Posteriormente, en 1980, se diferenció el colesteatoma del CAE y la queratosis obturatriz como entidades diferentes de una misma enfermedad. (2,6) Se desconoce la etiología exacta del colesteatoma del conducto (2), la oclusión o el estrechamiento del canal es la teoría más aceptada. (7)

Brookes y Grahams sostienen que, durante la obstrucción del conducto, la descamación del epitelio continúa y se coleccionan restos epidérmicos, modificando el recubrimiento del canal y originando el colesteatoma. (8) Se ha demostrado que la inflamación crónica cumple un papel clave en los múltiples mecanismos etiopatogénicos del colesteatoma adquirido del CAE. La infección crónica persistente puede aumentar la agresividad del colesteatoma

debido a la activación de osteoclastos y liberación de mediadores inflamatorios. ⁽⁹⁾

Holt, en 1992, describió cinco grupos en los que el colesteatoma puede observarse: 1. Pacientes en postoperatorio de cirugía de CAE, 2. Pacientes posttraumáticos, 3. Pacientes con estenosis del conducto auditivo (la mayoría congénitos), 4. Pacientes con obstrucción del conducto auditivo debido a tumor u osteoma, 5. Causa desconocida. ⁽⁹⁾

Las secuelas del osteoma están influenciadas principalmente por la agresividad del colesteatoma subyacente, cuyo pronóstico depende de su manejo. ⁽³⁾

Debido a la naturaleza insidiosa del colesteatoma del CAE puede ser poco sintomático o asintomáticos. La inflamación del CAE y la sepsis son complicaciones adicionales que podrían explicar la extensión extra temporal de la patología. ⁽³⁾

Las complicaciones reportadas del colesteatoma del CAE incluyen: Parálisis facial, erosión de la cadena osicular, fistulas laberínticas, extensión a mastoides aumentando el riesgo de lesión del nervio facial o extenderse a oído medio. ^(2,4) Las secuelas de la enfermedad están determinadas principalmente por la agresividad del colesteatoma subyacente, su correcta resolución depende del abordaje quirúrgico. ⁽³⁾

La tomografía computada de alta resolución es importante para evaluar la extensión de la enfermedad, evaluación del canal del nervio facial, el tegmen tympani y la mastoides, pudiendo definir el abordaje quirúrgico. ⁽⁵⁾ En la tomografía computada los osteomas se visualizan como una masa hiperdensa, pendulada, procedente de la sutura timpanomastoidea. ⁽¹⁾ La presencia de un colesteatoma se evidencia como densidad de partes blandas que puede ocupar el CAE, el oído medio e incluso poseer extensión intracraneal. ⁽²⁾

La principal complicación de un osteoma del CAE es el colesteatoma ⁽²⁾, siendo muy infrecuente su asociación, con sólo 5 casos reportados en la literatura además del presente caso. En la Tabla 1 se resumen los casos reportados de osteoma asociado a colesteatoma del CAE. ⁽³⁾

El tratamiento del osteoma del CAE depende principalmente de la localización, el tamaño y la sintomatología del paciente: Los osteomas pequeños podrían recibir un manejo conservador ⁽¹⁾, el tratamiento quirúrgico debe reservarse para aquellos pacientes con osteomas grandes, con síntomas de hipoacusia, infecciones a repetición o estenosis a lo largo del conducto. Los osteomas pediculados

Tabla 1. Resumen de casos reportados de osteoma asociado a colesteatoma del CAE

Ref	Año	Edad	Sexo	Hallazgo intraoperatorio	Técnica quirúrgica realizada	Canaloplastia	Resultados
Artículo en japonés	1986	-	-	--	-	-	-
11	1998	13	F	Erosión de pared posterior del CAE, con otitis media serosa	trans-meatal	No	Clínicamente libre de enfermedad a los 12 meses
4	2005	49	M	Erosión de pared posterior del CAE, envolviendo el oído medio	Incisión retroauricular, mastoidectomía abierta	No	Clínicamente libre de enfermedad a los 6 meses
2	2006	12	F	Erosión de pared posterior del CAE, envolviendo el oído medio con absceso cerebral	Incisión retroauricular, mastoidectomía radical técnica abierta.	No	-
3	2011	24	F	Erosión de la pared inferior del CAE y absceso cerebral	Trans-meatal y retroauricular incisión, mastoidectomía cortical	Sí	Clínicamente libre de enfermedad a los 12 meses
Caso Actual	2018	41	M	Erosión de la pared posterior del CAE, envolviendo mastoides y antro mastoideo	Incisión retroauricular, mastoidectomía radical conservadora	Sí	Clínicamente libre de enfermedad a los 6 meses

con implantación en la pared lateral podrían ser resecados por vía transmeatal; ubicaciones mediales o tumores de gran tamaño requieren abordajes retroauriculares. ⁽³⁾

El osteoma asociado a colesteatoma del CAE posee indicación quirúrgica. ⁽³⁾ La clasificación de los colesteatomas del CAE según Naim et al. determina la ubicación de la lesión y su posible abordaje quirúrgico: Estadio I- limitado al CAE, estadio II- invasión de la membrana timpánica y del oído medio, además del CAE, estadio III- defecto en las paredes del CAE con compromiso de la mastoides, estadio IV- lesiones más allá del hueso temporal. El manejo para los estadios I y II es la canaloplastia, y timpanoplastia en el último; para los estadios III

y IV el manejo es la mastoidectomía más timpanoplastía con reconstrucción de la pared del conducto; en el estadio IV la eliminación de la patología se realiza a través de varios enfoques. ^(10,11)

Diferentes vías de abordaje han sido propuestas, siendo la vía retroauricular la más frecuente y el procedimiento realizado en todos los casos reportados en la literatura fue la mastoidectomía radical o radical modificada, pudiéndose realizar o no canaloplastia. ⁽¹⁾ En nuestro caso se eligió la vía retroauricular y el procedimiento realizado fue la mastoidectomía radical modificada, con conservación de la cadena osicular más meatoplastia. El paciente se encuentra clínicamente libre de enfermedad luego de 6 meses del tratamiento quirúrgico.

Limitaciones del estudio: La baja incidencia de la patología, el escaso número de casos publicados en la literatura, la inexistencia de guías de manejo de la patología.

Conclusiones

El osteoma con colesteatoma del conducto auditivo externo son dos patologías poco frecuentes. Su diagnóstico y tratamiento oportuno permiten disminuir el riesgo de complicaciones.

Los autores no manifiestan conflictos de interés.

Bibliografía

1. Carbone PN, Nelson BL. External auditory osteoma. *Head Neck Pathol.* 2012; 6(2):244-6.
2. Viswanatha B. A case of osteoma with cholesteatoma of the external auditory canal and cerebellar abscess. *Int J Pediatr Otolaryngol Extra.* 2007; 2:34-39.
3. Khoyratty, F, Sweed, A, Douglas S, Magdy T. Osteoma with cholesteatoma of the external auditory canal: neck manifestation of this rare association. *J Surg Case Rep.* 2013 Jun; 2013(6): rjt048.
4. Lee DH, Jun BC, Park CS, Cho KJ. A case of osteoma with cholesteatoma in the external auditory canal. *Auris Nasus Larynx.* 2005;32(3):281-4.
5. Graham MD. Osteomas and exostoses of the external auditory canal. A clinical, histopathologic and scanning electron microscopic study. *Ann Otol Rhinolaryngol.* 1979; 88(4 Pt 1):566-72.
6. Zanini FD, Ameno ES, Magaldi SO, Lamar RA. Cholesteatoma of the external auditory canal: a case report. *Rev. Bras. Otolaryngol (Engl Ed).* 2005; 71:91-93.
7. Cheng Y, Shiao A, Lein C. Paediatric external canal cholesteatoma with extensive invasion into the mastoid cavity. *Int. J Pediatr Otolaryngol.* 2005; 69:561-666.
8. Brookes G, Grahams M. Posttraumatic cholesteatoma of the external auditory canal. *Laryngoscope.* 1984; 94:667-670.
9. Holt JJ. Ear canal cholesteatoma. *Laryngoscope.* 1992;102(6): 608-13.
10. Naim R, Linthicum F Jr, Shen T, Bran G, Hormann K. Classification of the external auditory canal cholesteatoma. *Laryngoscope.* 2005; 115(3):455-60.
11. Orita Y, Nishizaki K, Fukushima K, Akagi H, Ogawa T, Masuda Y, et al. Osteoma with cholesteatoma in the external auditory canal. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 1998;43(3):289-93.